

INTERVENTO COMPORTAMENTALE INTENSIVO PRECOCE

ESITI PER BAMBINI CON AUTISMO E GENITORI DOPO DUE ANNI

Bob Remington University of Southampton, UK

Richard P. Hastings University of Wales, Bangor, UK

Hanna Kovshoff e Francesca degli Espinosa University of Southampton, UK

Erik Jahr Akershus University Hospital, Norway

Tony Brown, Paula Alsford, Monika Lemaic e Nicholas Ward University of Southampton, UK

Riassunto

È stato identificato un gruppo d'intervento (n = 23) di bambini in età prescolare con autismo sulla base della preferenza dei genitori per un intervento di tipo comportamentale intensivo precoce, mentre un gruppo di controllo (n = 21) ha continuato ad essere sottoposto al consueto trattamento disponibile. Una valutazione prospettica è stata effettuata prima dell'inizio del trattamento, dopo 1 anno e ancora dopo 2 anni. I gruppi non mostravano differenze al momento della valutazione iniziale (baseline), ma dopo 2 anni si sono osservate differenze significative a favore dell'intervento comportamentale intensivo nelle misurazioni di intelligenza, linguaggio, abilità di vita quotidiana, comportamento sociale positivo, oltre a una differenza statistica nella misura delle migliori prestazioni. Misure del benessere dei genitori, raccolte negli stessi tre intervalli di tempo, non hanno evidenziato che l'intervento comportamentale fosse stato causa di un'esacerbazione delle problematiche né per le madri né per i padri dei bambini in trattamento.

Questo studio è stato finanziato tramite una sovvenzione dell'"Health Foundation" Regno Unito (<http://www.health.org.uk/>).

Gli autori sono molto grati per il generoso supporto al progetto. Un consorzio di 11 Autorità Edu-

WWW.IPPOCRATES.IT



cative Locali nel Sud dell'Inghilterra inclusi Southampton, Hampshire, East Sussex, Maidenhead e Windsor, Poole, Brighton e Hove, Wokingham, Wiltshire e Bournemouth, ha finanziato gli interventi dell'Università di Southampton per 13 bambini nel gruppo d'intervento. I restanti 10 bambini in quel gruppo sono stati seguiti da PEACH, the London Early Autism Program e dall'UK - Young Autism Programme. Gli autori ringraziano per il supporto collaborativo, sia finanziario sia pratico, tutti questi enti, senza i quali lo studio qui riportato non sarebbe stato possibile. Qualsiasi opinione qui espressa appartiene agli autori e non è necessariamente avallata dagli sponsor della ricerca o dai collaboratori. Francesca degli Espinosa ha avuto la funzione di supervisore senior ed Erik Jahr di consulente esterno per l'intervento dell'Università di Southampton. Gli autori ringraziano: Ruth Littleton, Sophie Orr e Penny Piggott che, con Paula Alford e Monika Lemaic, hanno fatto da supervisori al team dell'Università di Southampton; Corinna Grindle che ha contribuito con le analisi d'affidabilità; e Catherine Carr, che ha offerto un favoloso supporto amministrativo e logistico al team.

Per richieste di stampa e per contattare gli autori scrivere a: Bob Remington, Centre for Behavioural Research Analysis and intervention in Developmental Disabilities (BRAIDD), School of Psychology, University of Southampton Southampton, SO17 1BJ, UK.

E-mail: rer1@soton.ac.uk

Un numero sempre più ampio di ricerche empiriche suggerisce che un intervento precoce, intensivo, strutturato, basato sui principi dell'analisi applicata del comportamento (Applied Behavior Analysis, ABA), è efficace nel modificare i deficit intellettuali, linguistici e adattivi associati all'autismo. Lo studio originale di Lovaas (1987) evidenzia che un gruppo di bambini che ricevono 40 ore settimanali d'intervento comportamentale intensivo precoce a casa propria raggiunge significativi miglioramenti nelle misure del QI e del funzionamento sociale se paragonato con gruppi di controllo che ricevono un intervento meno intensivo oppure il trattamento standard offerto dai servizi educativi. Lo studio di follow-up di Mc Eachin, Smith e Lovaas (1993) evidenzia che i miglioramenti sono mantenuti all'età di 11,5 anni e che 8 bambini su 9, precedentemente identificati come i soggetti che avevano raggiunto il "miglior risultato", non possono essere distinti dai loro coetanei a sviluppo tipico da ricercatori tenuti all'oscuro del loro trattamento.

Dal 1987, molti ricercatori hanno condotto studi di valutazione che attestano l'efficacia di un intervento precoce sull'autismo, ma la maggior parte ha sofferto di limitazioni metodologiche che ne mettono a rischio la validità interna. Per e-

WWW.IPPOCRATES.IT



sempio, così come nello studio di Lovaas (1987), molti studi a seguire non sono stati propriamente caratterizzati da sperimentazioni randomizzate prospettiche perché i ricercatori non hanno avuto la possibilità di assegnare i bambini ai gruppi in modo casuale (es., Anderson, Avery, DiPietro, Edwards e Christian, 1987; Birnbrauer e Leach, 1993; Eikeseth, Smith, Jahr e Eldevik, 2002) oppure si sono avvalsi di dati d'archivio per formare un gruppo di controllo (Sheinkopf e Siegel, 1998). Altri ancora si sono affidati a semplici gruppi di controllo prima e dopo l'intervento (es., Stahmer e Ingersoll, 2004; Weiss, 1999) o a studi su singoli casi controllati (es., Green, Brennan e Fein, 2002).

Riassumendo, ci sono poche ricerche a controllo randomizzato che soddisfano adeguati criteri di validità interna e che evidenziano l'efficacia di un intervento comportamentale intensivo precoce. Due studi che rappresentano un'eccezione (Sallows e Graupner, 2005; Smith, Groen e Wynn, 2000) paragonano gli effetti dell'intervento precoce attuato usando un modello gestito dai clinici o dai genitori. Smith e colleghi (2000) mostrano che un intervento gestito dai clinici di 25 ore a settimana per 2 o 3 anni ha un impatto maggiore di un intervento meno intensivo basato sulla formazione dei genitori (5 ore a settimana). Misure di gruppo dell'intelligenza, delle capacità visuo-spaziali e del linguaggio dei bambini non differiscono all'età di 3 anni, ma cambiamenti a favore del gruppo gestito dai clinici sono presenti a 7-8 anni di età. Contrariamente, Sallows e Graupner (2005) non riscontrano differenze in simili misure tra programmi gestiti dai clinici e dai genitori dopo 4 anni di trattamento. In questo studio, ad ogni modo, le differenze tra i gruppi nell'intensità dell'intervento sono molto meno marcate.

La scarsità di ricerche a controllo randomizzato in quest'area riflette le considerevoli difficoltà che si incontrano nella loro organizzazione: a differenza dagli studi sui farmaci, in cui i pazienti all'inizio sono in condizione cieca all'intervento, i genitori sono resi ben consapevoli in anticipo del trattamento che i loro bambini riceveranno. In più, mentre le conoscenze si accumulano e l'intervento precoce è

WWW.IPPOCRATES.IT



sempre più accettato come il trattamento per eccellenza per l'autismo (es., Surgeon-General, 1999), i ricercatori si trovano ad affrontare le difficoltà etiche dell'assegnazione casuale ai gruppi, e le famiglie diventano meno desiderose di impegnare i loro bambini in trattamenti di lunga durata e dubbia utilità. Perciò, benché un approccio alla sperimentazione con controllo randomizzato possa, in condizioni ideali, produrre la più forte evidenza nello stabilire l'efficacia di un intervento (vedi, es., Whitehurst, 2003), potrebbe essere difficile condurre ulteriori esperimenti di valutazione di un intervento comportamentale intensivo precoce, a meno che si riescano a trovare alternative ben assortite ed egualmente credibili da opporre alle procedure standard.

In ogni caso, è verosimile che l'efficacia nella pratica di un intervento comportamentale intensivo precoce sarebbe sovrastimata da qualsiasi esperimento randomizzato supposto. In generale, la validità esterna di tali esperimenti è compromessa da un severo controllo delle variabili, inclusa la comorbidità, la fedeltà del trattamento, l'aderenza al trattamento, e l'auto-selezione nelle ricerche (Kendall, Chu, Gifford, Hayes e Nauta, 1998; Persons e Silberschatz, 1998; Seligman, 1995). L'assenza di controllo su tali fattori è comune nei setting tipici dei servizi per cui il beneficio clinico a lungo termine di qualsiasi intervento dipende dagli effetti restanti che pertanto agiscono in condizioni non certamente ottimali. Considerazioni di questo tipo stanno alla base dello sviluppo di ricerche sul campo sull'efficacia, in cui l'assegnazione casuale ai gruppi e un più rigoroso controllo sperimentale vengono valutati rispetto a una più naturalistica valutazione d'erogazione del servizio nell'ambiente. Due recenti valutazioni di interventi comportamentali precoci per l'autismo hanno adottato questo approccio (H. Cohen, Amerine-Dickens e Smith, 2006; Howard, Sparkman, Cohen, Green e Stanislaw, 2005).

Usando i criteri del Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders (DSM-IV; American Psychiatric Association, 1994) piuttosto che lo strumento di

WWW.IPPOCRATES.IT



ricerca ottimale, cioè l'Autism Diagnostic Interview-Revised (Lord, Rutter e Le Couteur, 1994), Howard e colleghi (2005) hanno identificato 61 bambini che soddisfacevano i criteri per il disturbo autistico o per il disturbo pervasivo dello sviluppo non altrimenti specificato (Pervasive Developmental disorders - not otherwise specified, PDD-NOS). Si sono messi a confronto 29 bambini che hanno ricevuto un intervento analitico comportamentale intensivo gestito dai clinici (da 25 a 40 ore settimanali) con due gruppi di controllo, uno (n = 16) che ha ricevuto un intervento complesso ugualmente intensivo, l'altro (n = 16) i cui membri non sono stati coinvolti in alcun programma d'intervento pubblico intensivo. L'assegnazione ai gruppi non era casuale, ma dipendeva dal consiglio dei medici, "tenendo altamente in considerazione le preferenze genitoriali" (Lord et al., 1994, p. 364). Insolitamente, Howard e colleghi hanno evitato il paragone diretto dei gruppi usando modelli ANOVA, preferendo invece un'analisi basata sulla regressione multipla, con l'appartenenza a ciascun gruppo come variabile categoriale. Questo evidenzia che prima del trattamento non c'erano differenze tra il gruppo d'intervento comportamentale analitico e i due gruppi di controllo combinati.

In una seconda analisi di funzionamento 14 mesi dopo, Howard e colleghi (2005) hanno riscontrato che i bambini nel gruppo di intervento analitico comportamentale intenso ottengono punteggi più alti di quelli dei gruppi di controllo combinati in test standardizzati di funzionamento cognitivo, linguistico e adattivo. Sebbene gli effetti implicati da queste analisi ricevano, in un test simile, conferma dell'assoluto cambio di punteggio in tutte le misurazioni, non è stata presentata alcuna analisi che prenda in considerazione il cambio condizionato (es., relativo ai punteggi iniziali).

In uno studio triennale con esiti prospettici condotto in un setting di comunità, Cohen e colleghi (2006) hanno messo a confronto 21 bambini che hanno ricevuto un trattamento comportamentale intensivo precoce con un ugual numero di bambini che sono stati inseriti in classi di educazione speciale in scuole pubbliche.

WWW.IPPOCRATES.IT



L'assegnazione ai gruppi non è stata casuale, bensì basata sulle preferenze dei genitori e su un processo di revisione degli elenchi usato per identificare un bambino con lo stesso Quoziente Intellettivo (QI) ed Età Cronologica (EC) di ciascun bambino che riceveva l'intervento intensivo. In questo modo, è stato possibile formare un gruppo di bambini "che soddisfacevano i criteri di partecipazione... e i cui genitori avevano scelto altri servizi" (p. S147). Entrambi i gruppi includevano alcuni bambini con una diagnosi d'autismo e altri con una diagnosi di PDD-NOS, ma la proporzione di questi ultimi era più bassa nel gruppo d'intervento. Le analisi della covarianza (ANCOVA), usando i punteggi iniziali come covarianti e mettendo a confronto le performance dopo 1, 2 e 3 anni, rivelano che il gruppo intensivo è superiore nelle misure di QI e comportamento adattivo, ma non nelle misure di linguaggio e capacità non-verbali. Inoltre, la mancanza di un'interazione Gruppo \times Tempo indica che le differenze di performance tra i gruppi raggiunte dopo 12 mesi non aumentano durante il trattamento. Il numero di bambini che hanno ottenuto un punteggio nella norma nella misura di esito primaria (cioè il QI) è più alto nel gruppo d'intervento intensivo dopo 3 anni, ma questa differenza non raggiunge la significatività statistica.

I risultati degli studi di Howard e colleghi (2005) e di H. Cohen e colleghi (2006) suggeriscono che un intervento comportamentale intensivo precoce può essere efficace se condotto in setting tipici di comunità e quando messo a confronto con il trattamento usuale - la tipica combinazione di interventi disponibile per bambini con autismo. Nonostante ciò, in comune con quasi tutta la ricerca in quest'area, questi ricercatori non hanno preso in considerazione due questioni cruciali di cui cercheremo di occuparci nella presente ricerca.

Prima di tutto, l'intervento comportamentale intensivo precoce ha un impatto al di là dei deficit nel comportamento cognitivo, linguistico e adattivo associati con l'autismo, che affliggono ulteriormente i caratteristici sintomi diagnostici del disturbo? Nel presente studio, sono state incluse scale di misura del quadro anti-

WWW.IPPOCRATES.IT



stico, dei problemi sociali e del comportamento prosociale, oltre a una misura basata sull'osservazione dell'attenzione congiunta (Mundy e Crowson, 1997). La seconda questione di cui ci siamo occupati riguarda l'impatto di un intervento intensivo sui membri della famiglia. Questo punto è stato studiato in maniera minima, e anche se i dati esistenti suggeriscono che le madri, i fratelli e le sorelle dei bambini partecipanti allo studio non sono affetti in maniera negativa (Birnbrauer e Leach, 1993; Hastings, 2003a; Hastings e Johnson, 2001; Smith, Buch e Gamby, 2000; Smith, Groen e Wynn, 2000), non è stato finora pubblicato alcuno studio controllato di una gamma di misure del benessere sia materno che paterno.

È stata inoltre studiata una questione metodologica chiave, concernente l'efficacia dell'intervento, tramite l'utilizzo di un approccio più preciso per identificare i bambini con il "miglior esito" basato sui criteri oggettivi di Jacobson e Truax (1991); si intendeva stabilire se un particolare bambino avesse beneficiato significativamente di un intervento. Questi criteri sono il cambiamento affidabile (fino a che punto i fattori statistici possono essere esclusi come spiegazione dell'apparente cambiamento) e il cambiamento clinicamente significativo (fino a che punto il cambiamento è clinicamente significativo). Anche se in studi precedenti i ricercatori avevano usato come criterio un QI che rientrasse nella normale gamma di variazione (Birnbrauer e Leach, 1993; Eikeseth et al., 2002; Lovaas, 1987; McEachin et al., 1993; Sallows e Graupner, 2005; Smith et al., 2000), per quanto ne sappiamo questo è il primo studio che applica simultaneamente i criteri statistici sia del cambiamento affidabile sia del cambiamento clinicamente significativo ai risultati di programmi di intervento comportamentale intensivo precoce.

Queste tre questioni chiave sono state esplorate all'interno del sistema educativo del Regno Unito, mentre in ricerche precedentemente pubblicate, basate su un'indagine non controllata dell'impatto dei programmi condotti a casa, Bibby, Eikeseth, Martin, Mudford e Reeves (2001) hanno riportato solo minimi risultati e

WWW.IPPOCRATES.IT



ampie variazioni nella qualità e nell'intensità d'erogazione del servizio. Al contrario, si è cercato di costruire il più rigoroso studio di campo controllato sull'efficacia ottenibile nei limiti della cultura prevalente. Ciò prevede un disegno di ricerca longitudinale della durata di 2 anni, che mette a confronto bambini con autismo le cui famiglie avevano richiesto un intervento comportamentale intensivo condotto da una serie di diversi enti di servizi in Inghilterra, con bambini i cui genitori non

avevano cercato questo tipo di intervento e stavano quindi ricevendo i tipici servizi prescritti dalla legge (trattamento usuale).

Riassumendo, questo studio è stato disegnato come test rigoroso per determinare se l'uso continuativo di un intervento comportamentale intensivo precoce per bambini con autismo potesse portare a benefici, incorporando una larga serie di misure degli effetti sia sui bambini con autismo che sui loro genitori. Sono stati usati criteri oggettivi per identificare i bambini col "miglior esito". Sulla base di precedenti studi sull'efficacia, ci si aspettava che l'intervento

portasse a miglioramenti nel funzionamento cognitivo, linguistico e sociale dei bambini se paragonato al trattamento usuale. Ricerche precedenti sulle famiglie suggeriscono che il benessere psicologico dei genitori non è condizionato in senso negativo dall'essere coinvolti in un intervento intensivo, anche se non era chiaro se ci si potessero aspettare degli esiti positivi.

Data la scarsità di dati pubblicati, non c'erano aspettative su eventuali cambiamenti positivi nel grado dei sintomi autistici, dei problemi di comportamento o nelle misure del comportamento di attenzione congiunta a seguito dell'intervento comportamentale intensivo precoce.

Metodologia

Rassegna generale del disegno di ricerca

Sono stati identificati due gruppi di bambini in età prescolare con una formale

WWW.IPPOCRATES.IT



diagnosi di autismo. I genitori dei bambini nel gruppo di intervento hanno scelto interventi comportamentali intensivi precoci, alcuni procurati tramite fondi pubblici e altri ottenuti privatamente; i genitori dei bambini nel gruppo di controllo non hanno attivamente ricercato l'intervento comportamentale, e invece hanno ricevuto un servizio standard dalla provvigione dei fondi pubblici, condotto dalla loro Autorità Educativa Locale (es., trattamento usuale).

Le valutazioni del funzionamento cognitivo, del comportamento adattivo, dei comportamenti autistici e delle abilità sociali e comunicative dei bambini sono avvenute in tre momenti di raccolta dei dati: prima dell'intervento (baseline), dopo 1 anno, e ancora dopo 2 anni d'intervento (assessment a 12 e a 24 mesi). Le misurazioni della salute mentale dei genitori, del loro livello di stress e delle loro percezioni positive nei confronti del figlio sono state raccolte negli stessi tre intervalli di tempo.

Soggetti

Bambini con autismo. I bambini sono stati reclutati attraverso segnalazioni delle autorità educative locali, attraverso avvisi della United Kingdom National Autistic Society e delle sue sedi regionali, e attraverso gruppi di genitori o servizi di volontariato. I dati demografici delle famiglie sono registrati nella tabella 1 e i dati relativi ai bambini sono evidenziati nella tabella 2 (per informazioni sul baseline vedi Risultati). Per soddisfare i criteri di inclusione per questo studio tutti i bambini, sia del gruppo sperimentale sia di controllo, dovevano possedere le seguenti caratteristiche. Prima di tutto, era richiesta una diagnosi di autismo basata sull'Autism Diagnostic Interview-Revised, completata da un operatore (l'ultimo autore) formato per la somministrazione e il calcolo del punteggio di questo strumento per fini di ricerca. Tutti i bambini, inoltre, avevano già ricevuto una diagnosi di autismo da un clinico indipendente dal programma di ricerca o avevano ricevuto una sospetta diagnosi di autismo.

WWW.IPPOCRATES.IT



Secondo, i bambini dovevano avere tra i 30 e i 42 mesi di età al tempo del loro inserimento. Terzo, non dovevano presentare alcuna altra condizione medica cronica o seria che potesse interferire con la conduzione di un intervento consistente o potesse altrimenti avere effetti avversi sullo sviluppo. Infine, tutti i bambini vivevano in casa con la loro famiglia.

Sono stati identificati 44 bambini che soddisfacevano questi criteri. Le famiglie di 23 di questi, che costituivano il gruppo di intervento, avevano scelto l'intervento comportamentale intensivo precoce, ricevendo la provvigione dall'Università di Southampton e i fondi tramite il loro servizio educativo locale ($n = 13$) oppure tramite un servizio privato ($n = 10$).

In quest'ultimo caso, i servizi erano pagati dai genitori stessi o dal loro servizio educativo locale. Le restanti 21 famiglie, del gruppo di controllo, ricevevano varie forme di provvedimenti educativi per i loro bambini corrisposti da enti pubblici. I gruppi differivano leggermente per età cronologica (EC), essendo i bambini del gruppo di controllo ($M = 38,4$ mesi, $DS = 4,4$) in media approssimativamente 3 mesi più grandi dei bambini nel gruppo di intervento ($M = 35,7$ mesi, $DS = 4,0$), $t(42) = 2,14$, $p < 0,05$. Nessuna altra variabile demografica stimata per i bambini differiva nei due gruppi al momento iniziale. L'età cronologica è stata esplorata come una variabile di controllo nelle principali analisi statistiche.

Genitori. Quarantaquattro madri e 31 padri dei bambini nel gruppo di intervento e di controllo hanno presentato dati su qualche aspetto del funzionamento del bambino e sul proprio benessere. I loro dettagli demografici sono esposti nella tabella 1. Nell'insieme della ricerca, 40 coppie sono state incluse nella stima iniziale. Nel caso di 9 famiglie, il padre ha declinato l'invito a partecipare alla ricerca. Nel caso di 4 famiglie, il padre non viveva nella stessa casa della madre e del bambino con autismo al momento iniziale della ricerca; questi padri non hanno preso parte alla ricerca. I due gruppi erano molto simili nella maggioranza delle caratteristiche demografiche dei genitori/famiglia. Anche se erano presenti al-

cune differenze demografiche, nessuna differenza tra i gruppi era abbastanza grande da raggiungere la significatività statistica dello 0,05. Quindi, nessuna di queste caratteristiche è stata considerata come possibile variabile di controllo nelle seguenti analisi.

Misure relative ai bambini

Sono stati utilizzati strumenti normativi per raccogliere dati sugli esiti cognitivi, linguistici e comportamentali dei bambini. Gli strumenti di valutazione sono stati scelti per le loro buone proprietà psicometriche e per il loro uso in studi pubblicati con popolazioni simili.

Un'importante considerazione riguarda la potenziale utilità di tali strumenti nel testare i bambini con autismo. Molti test richiedono abilità di linguaggio e di attenzione sostenuta, due abilità che potrebbero avere un effetto su questi bambini, i cui deficit sintomatici nel linguaggio, nel comportamento intellettuale, neurologico e adattivo e nelle abilità interpersonali potrebbero influenzare la performance su misure standardizzate e perciò avere un impatto sull'affidabilità e sulla validità di qualsiasi test. Tutti i test sono stati somministrati seguendo le procedure standard per assicurare che i dati ottenuti fossero confrontabili con quelli di altri studi. In alcuni casi questo potrebbe potenzialmente portare a sottostimare l'abilità dei bambini (es., i bambini che si fermano a un certo punteggio nella Scala di Bayley avrebbero potuto raggiungere punteggi migliori se fossero loro stati somministrati item non verbali e non sociali); ad ogni modo, i metodi usati per calcolare i punteggi non hanno favorito in alcun modo un gruppo piuttosto che un altro.

I test selezionati sono stati somministrati da un esperto specializzato in psicommetria (il terzo autore), che aveva 4 anni di esperienza con bambini con autismo e che ha messo in pratica ogni accortezza al fine di ottenere dati affidabili e validi. Nonostante le risorse disponibili non permettessero di condurre controlli

WWW.IPPOCRATES.IT



formali indipendenti sull'affidabilità nei casi in cui erano disponibili valutazioni da parte d'esperti psicometrici indipendenti, questi punteggi rientrano sempre in un intervallo d'errore standard di misurazione qui di seguito riportato. Inoltre, il terzo autore non è stato informato dello status del gruppo, ha lavorato indipendentemente dai team d'intervento, non ha avuto accesso alle relazioni sulla ricerca e i suoi contatti con le famiglie erano limitati all'assessment annuale.

Funzioni intellettive. La scala di Bayley e la Stanford Binet Intelligence Scale, IV Editino (Thorndike, Hagen e Sattler, 1986) sono state entrambe scelte, in parte, per la loro bassa soglia d'accesso. La scala Bayley, studiata per bambini fino ai 42 mesi d'età, è adatta a bambini con disabilità intellettive o a quelli le cui abilità linguistiche non sono sufficientemente sviluppate per completare un test d'intelligenza articolato. Se la Scala Bayley è somministrata a bambini d'età cronologica (EC) superiore alle norme del test, la loro età mentale (EM) si calcola in base ai loro punteggi grezzi usando la tabella B.2 del manuale Bayley. L'indice di QI è quindi calcolato usando la formula $EM/EC \times 100$. La Stanford-Binet fornisce dati normativi a partire dai 2 anni d'età e, avendo un solo subtest a tempo, offre un buon livello di flessibilità nella valutazione di bambini con autismo.

Tabella 1

Caratteristiche demografiche delle famiglie per gruppo

Famiglie						
Stato Civile						
Sposato	16	69,6		16	76,2	
Vive col partner	4	17,4		4	19	
Divorziato/Separato/Single e non vive col partner	3	13		1	4,8	
Fratelli e sorelle						
0	5	21,7		3	14,3	
1	11	47,8		13	61,9	
2	7	30,4		4	19	
3	0	0		1	4,8	
Fratelli e sorelle con disturbi dello sviluppo						
0	20	87		13	61,9	
1	2	13		7	33,3	
2	0	0		1	4,8	
Tutte le madri (= 44)						
Età media	35,7	4,2	26-42	33,6	3,8	26-41
Livello di educazione						
Educazione non universitaria	13	57		17	81	
Educazione universitaria	10	43		4	19	
Lavoro pagato						
Tempo pieno	7	30,4		7	33,3	
Part-time	0	0		0	0	
	7	100		7	100	
Tutti i padri che vivono in casa con la famiglia (= 40)						
Età media	38,88	5,5	31-50	37,1	4,8	30-53
Livello di educazione						
Educazione non universitaria	10	50		11	55	
Educazione universitaria	10	50		9	45	
Lavoro pagato						
Tempo pieno	19	95		18	90	
Part-time	19	100		17	94,4	
	0	0		1	5,6	
Padri che hanno risposto al questionario (= 31)						
Età media	38,7	4,8	31-50	37,5	5,4	30-53
Livello di educazione						
Educazione non universitaria	7	44		8	53	
Educazione universitaria	9	56		7	47	
Lavoro pagato						
Tempo pieno	15	93,8		13	86,7	
Part-time	15	100		12	92,3	
	0	0		1	7,7	

. Tutte le madri hanno risposto al questionario, mentre solo 31 padri hanno risposto. I dati per entrambi i sottogruppi sono esposti nella tabella.

Tabella 2

Medie non adattate (DS) delle misure dei bambini per gruppo e momento di valutazione

QI**	61,43 (16,43)	62,33 (16,64)	68,78 (20,49)	58,90 (20,45)	73,48 (27,28)	60,14 (27,76)
EM***	22,04 (6,89)	23,71 (6,00)	33,70 (10,16)	29,81 (9,89)	44,39 (16,39)	38,00 (17,44)
VABS*						
Compositi	114,78 (26,89)	113,57 (29,78)	169,70 (49,07)	145,76 (45,56)	202,83 (61,98)	182,86 (58,89)
Comunicazione	23,52 (11,35)	21,62 (10,81)	42,83 (18,25)	34,62 (17,17)	54,74 (24,43)	46,00 (24,51)
Vita quotidiana*	24,13 (7,49)	25,43 (10,56)	39,52 (14,71)	35,52 (14,34)	50,22 (16,46)	44,67 (16,99)
Socializzazione	29,57 (6,65)	28,29 (7,48)	38,52 (12,57)	33,14 (11,77)	43,52 (15,94)	41,48 (14,52)
Abilità motorie*	37,57 (6,37)	38,24 (7,06)	48,83 (6,84)	44,46 (7,70)	54,35 (9,12)	50,71 (8,21)
Attenzione congiunta*						
Iniziativa di	3,33 (4,40)	3,63 (4,92)	7,71 (7,52)	6,16 (8,79)	11,76 (9,41)	11,19 (13,86)
Abilità di risposta alla*	5,29 (3,62)	5,94 (3,91)	8,95 (4,18)	7,13 (5,21)	11,29 (3,47)	10,06 (4,99)

*Bà mentale. *Punteggi grezzi della Vineland Adaptive Behavior Scale. Misurato usando le Early Social Communication Scales. **p < 0,05. ***p < 0,01 sui principali effetti per i dati combinati a 12 e 24 mesi. Gruppo d'intervento = 23 e Gruppo di controllo = 21, eccetto per l'attenzione congiunta, gruppo d'intervento = 21; gruppo di controllo = 16.

Linguaggio.

Le Reynell Developmental Language Scales - Third Edition (Edwards et al., 1997) sono state scelte prima di tutto perché sono uno dei pochi strumenti di valutazione del linguaggio usati in precedenza negli studi sugli esiti dell'intervento comportamentale intensivo precoce e perché comprendono misure separate per l'espressione e per la comprensione del linguaggio. Ad ogni modo, la versione usata, adattata per il Regno Unito, fornisce dati normativi solamente dai 21 mesi d'età, significativamente più tardi rispetto alle norme della versione che risale al 1985, la quale iniziava a partire dai 12 mesi.

Abilità adattive. La Vineland Adaptive Behavior Scale - Survey Form (Sparrow, Balla e Cicchetti, 1984) è stata scelta in quanto molto diffusa e al fatto che ne esiste una versione ridotta (la "survey form"). La Scala Vineland valuta quattro domini del comportamento adattivo: Socializzazione, Comunicazione, Abilità di vita quotidiana e Abilità motorie. Sfortunatamente, i miglioramenti nel comportamento adattivo dei bambini con autismo non sono sempre rilevati dai punteggi standardizzati della scala Vineland. Questo dipende in parte dal fatto che i bambini a più alto funzionamento mostrano profili di sviluppo disomogenei con differenze tra i vari domini (Burack e Volkmar, 1992) e in parte dal fatto che i bambini a basso funzionamento possono mostrare poca disomogeneità, dovuta a effetti basali (Carter et al., 1998). Per evitare tali problemi nelle applicazioni sperimentali con bambini autistici (al contrario delle applicazioni diagnostiche) Carter e colleghi (1998) raccomandano di usare i punteggi grezzi piuttosto che i punteggi standardizzati.

Scale di valutazione per il comportamento dei bambini. La Positive Social Subscale del Nisonger Child Behavior Rating Form (Tassé, Aman, Hammer e Rojahn, 1996) e la versione con resoconto genitoriale della Developmental Behavior Checklist (Einfeld e Tonge, 1995) sono state scelte per valutare il comportamento

WWW.IPPOCRATES.IT



del bambino. La scala Nisonger è una scala di valutazione che dà informazioni sul comportamento studiata per valutare bambini con disabilità intellettive. La Developmental Behavior Checklist è un questionario valutativo del comportamento contenente un Punteggio di Comportamento Totale, che indica la gravità dei problemi di comportamento e offre dei sottoinsiemi di item che funzionano come un valido e affidabile strumento di screening dell'autismo (Developmental Behavior Checklist- Autism Screening Algorithm, Einfeld e Tonge, 2002). È stato usato anche l'Autism Screening Questionnaire (Berument, Rutter, Lord, Pickles e Bailey, 1999). Questo strumento, derivato dall'Autism Diagnostic Interview algorithm (Lord et al., 1994) e completato dai genitori, fornisce un punteggio dimensionale per i sintomi autistici che sono stati usati nelle analisi.

Misure osservazionali della comunicazione sociale non verbale. Le Early Social Communication Scales (Mundy, Hogan e Dohering, 1996) sono uno strumento osservazionale semistrutturato videoregistrato in cui chi somministra il test presenta una serie standard di giochi, studiati in modo da sollecitare comportamenti sociali e comunicativi in un contesto ecologicamente valido. Le variabili chiave ottenute tramite la somministrazione delle scale sono state una misura dell'iniziativa e una misura dell'abilità di risposta all'attenzione congiunta.

L'iniziativa di attenzione congiunta si riferisce alla frequenza con cui i bambini usano il contatto visivo, indicano e mostrano, al fine di condividere l'esperienza di un gioco o di un oggetto durante il test. L'abilità di risposta all'attenzione congiunta si riferisce al numero di volte, in otto prove, in cui un bambino rivolge correttamente il suo sguardo e allinea l'attenzione nella direzione di un poster che gli o le è indicato da chi conduce il test. I bambini con autismo hanno meno probabilità, rispetto ai bambini a sviluppo tipico o ai bambini con disabilità intellettive, di iniziativa o di abilità di risposta all'attenzione congiunta (McEvoy, Rogers e Pennington, 1993; Mundy e Crowson, 1997; Mundy, Sigman, Ungerer e Sherman, 1986). Di conseguenza, il presente studio ha cercato di valutare se questi com-

WWW.IPPOCRATES.IT



portamenti d'interazione sociale possano migliorare diversamente per il gruppo di intervento come risultato della partecipazione a un programma che richiede molte ore di interazione uno-a-uno con adulti.

L'affidabilità inter-osservatore è stata stimata usando dati videoregistrati del 25% dei bambini (9) ad ogni punto nel tempo, rilevati da un operatore indipendente tenuto all'oscuro dello status del gruppo e istruito sul livello d'affidabilità usando videocassette di prova sulla Early Social Communication Scale. Le correlazioni interclasse tra valutazioni appaiate, usate per stimare la consistenza tra i codici degli osservatori in tutti e tre i punti d'assessment, variano da 0,95 a 0,99 per l'iniziativa di attenzione congiunta e da 0,96 a 0,97 per l'abilità di risposta all'attenzione congiunta.

Misure self-report del benessere genitoriale

La Hospital Anxiety and Depression Scale (Zigmond e Snaith, 1983), scelta come misura della salute mentale dei genitori, include due subscale, che valutano una depressione e l'altra l'ansia. Ricerche precedenti con genitori di bambini con autismo hanno mostrato che tale misurazione ha un'alta affidabilità (consistenza interna) sia per le madri sia per i padri di bambini con autismo (Hastings, 2003b; Hastings e Brown, 2002). La subscale relativa ai problemi dei genitori e della famiglia del Questionnaire on Resources and Stress - Friedrich short form (Friedrich, Greenberg e Crnic, 1983) è stata scelta come misura generale dello stress genitoriale. Il punteggio totale dello stress oltre 5 item fornito da questa scala, che in precedenza è stato accettato come una valida misura della depressione in genitori di bambini con disabilità (Glidden e Floyd, 1997), è stato tolto dalla scala complessiva. Questa modifica ha assicurato che non si creasse confusione tra le misure di stress e di salute mentale. La risultante scala, di 15 item, ha evidenziato una forte coerenza interna nel presente campione (i coefficienti di Kuder-

WWW.IPPOCRATES.IT



Richardson sono 0,87 per le madri e 0,83 per i padri al baseline). Il Kansas Inventory of Parental Perceptions Positive Contributions subscale (Behr, Murphy e Summers, 1992) è stato scelto come misura del grado in cui i genitori avvertono percezioni positive del loro bambino e dell'impatto del bambino sulla famiglia (es., avvicinare di più la famiglia, aiutare gli altri membri della famiglia a diventare più comprensivi verso le altre persone, ed essere una risorsa di felicità e soddisfazione). Nella presente ricerca, è stato usato il punteggio totale delle percezioni positive. Tale punteggio ha evidenziato un alto livello di consistenza interna sia per le madri, alfa di Cronbach = 0,95, sia per i padri, alfa = 0,95.

Procedura

Gruppo di intervento.

A tutti i bambini nel gruppo di intervento è stato somministrato l'intervento comportamentale intensivo precoce per 2 anni. Tutor istruiti e genitori hanno svolto l'insegnamento uno-a-uno basato sull'analisi del comportamento applicata in media per 25,6 ore settimanali (DS = 4,8, range = da 18,4 a 34,0). Tredici dei 21 programmi sono stati forniti dall'Università di Southampton ed erano gratis per i genitori nominati dall'autorità educativa locale che forniva i fondi al team d'intervento dell'Università (che include il quarto, quinto, settimo e ottavo autore). I restanti programmi sono stati condotti da altri enti del Regno Unito, pagati direttamente dai genitori o comprati per i genitori dalle loro Autorità Educative Locali. Questi enti includono il PEACH, un servizio di volontariato composto di genitori (n = 4), il London Early Autism Program (n = 1), lo United Kingdom-Young Autism Programme (n = 1), e l'East Sussex Local Education Authority (n = 1). Il bambino escluso dai precedenti programmi è stato seguito per 9 mesi dal PEACH, per 9 mesi da un consulente privato e gli ultimi 6 mesi da una scuola dove l'analisi comportamentale applicata era regolarmente utilizzata (era

WWW.IPPOCRATES.IT



l'unico bambino a frequentare tale scuola).

Nonostante gli interventi fossero condotti da una serie di enti fornitori di servizi, tutti avevano in comune le 10 caratteristiche degli interventi basati sulla ricerca identificati da Green e colleghi (2002, p. 70). All'inizio del trattamento, svolto nell'ambiente familiare, tutti i bambini avevano tra i 3 e i 4 anni. Il trattamento, che si è protratto per 2 anni, includeva da 20 a 30 ore settimanali di insegnamento strutturato, basato sui principi dell'analisi del comportamento applicata. Perciò, i programmi comprendevano metodi di insegnamento strutturato con prove distinte (Lovaas, 1993) e incorporavano procedure di generalizzazione per estendere e mantenere i repertori comportamentali emergenti. Nella maggior parte degli interventi furono anche integrati elementi di training ambientale naturale (Sundberg e Partington, 1999) e di comportamento verbale (Partington e Sundberg, 1998).

In alcuni casi, alternative riconosciute e sistemi di comunicazione aumentativi basati sui principi comportamentali sono stati incorporati negli interventi per ovviare all'assenza di linguaggio e fornire ai bambini iniziali mezzi di comunicazione. A 12 mesi, il 44% (10) dei bambini nel gruppo d'intervento stava usando il Picture Exchange Communication System e il 17% (4) continuava a farlo dopo 24 mesi. Per il linguaggio dei segni o per i Makaton Communication Systems, le figure erano rispettivamente il 44% (10) dopo 12 mesi e il 35% (8) dopo 24 mesi.

Per ogni bambino sono stati individuati programmi di intervento che coprivano tutti gli aspetti del funzionamento (es., linguaggio, altri aspetti del funzionamento cognitivo, sociale e motorio), basandosi su analisi in corso delle attuali forze e bisogni, prendendo in considerazione la tipica evoluzione dello sviluppo e la praticabilità degli interventi. I programmi erano dunque progressivi: quando i bambini acquisivano le abilità più semplici, si stabilivano abilità più complesse come obiettivi comportamentali, e questo processo continuò per i 2 anni d'intervento. Allo stesso modo, quando le abilità dei bambini aumentavano, iniziava il processo

WWW.IPPOCRATES.IT



d'accesso facilitato ad appropriati setting scolastici.

Il programma è stato consegnato a ogni bambino da un gruppo di 3-5 terapisti istruiti all'uso delle procedure comportamentali analitiche (es., shaping, chaining, prompting, fading, modeling, apprendimento discriminato, analisi del compito, analisi funzionale) e supervisionato da membri dello staff con più esperienza, incluso un supervisore che aveva una sostanziale esperienza nell'ambito dell'intervento comportamentale intensivo precoce e, nella maggior parte dei casi, un consulente con ancor più esperienza, a livello di dottorato e/o una serie di ricerche pubblicate sul tema dell'analisi comportamentale. I genitori stessi conducevano la terapia, con il medesimo metodo di supervisione.

Per la supervisione dei tutori dei vari staff è stato usato un modello di workshop in cui i supervisori organizzavano incontri con lo staff a intervalli regolari. La frequenza degli incontri dello staff dipendeva dal fornitore di servizi; per i 13 bambini che hanno ricevuto l'intervento supervisionato dell'Università di Southampton, gli incontri si tenevano due volte al mese, con ulteriori training sovrapposti regolarmente; per i bambini restanti, gli incontri erano meno frequenti (range = 4-12 settimane). Durante gli incontri, si valutava il progresso dei bambini rispetto all'incontro precedente, si aggiungevano o modificavano i programmi e i membri dello staff (inclusi i genitori) facevano pratica dei programmi da attuare. I consulenti partecipavano ai meeting meno frequentemente (in media, una volta ogni 2 mesi). Ad ogni modo, questi rimanevano disponibili a offrire supervisione clinica supplementare via telefono o via e-mail. Allo stesso modo, tra un meeting e l'altro, i supervisori rimanevano a disposizione del resto dello staff e dei genitori.

Nessun bambino nel gruppo d'intervento stava frequentando la scuola al momento dell'assessment iniziale ma, dopo 12 mesi, 13 bambini (57%) stavano frequentando una scuola tradizionale in media per 5,8 ore a settimana. Dopo 24 mesi, 17 bambini (74%) stavano frequentando una scuola tradizionale in media per 13,28 ore

WWW.IPPOCRATES.IT



settimanali; e il 22% (5), una scuola per bisogni speciali in media per 9,15 ore a settimana. L'ultimo bambino continuava con il solo programma svolto a casa. Poiché la maggior parte dei bambini nel gruppo di intervento frequentava la scuola e allo stesso tempo seguiva il programma a casa, le ore di scuola erano leggermente inferiori a quelle dei bambini del gruppo di controllo al primo e al secondo anno dello studio. I principi del TEACCH-Treatment and Education of Autistic and Related Communication Handicapped Children (Schopler, Mesibov e Baker, 1982) erano talvolta inclusi negli interventi scolastici di 2 bambini (9%) dopo 12 mesi e del 13% (3) dopo 24 mesi.

Oltre al trattamento comportamentale e alla scolarizzazione, alcuni bambini nel gruppo di intervento sono stati sottoposti anche ad altri interventi. Il 65% (15) stava già seguendo terapia del linguaggio al tempo della valutazione iniziale. Il 22% (5) la stava seguendo dopo 12 mesi; e il 26% (6), dopo 24 mesi. Sono stati anche frequentemente riportati interventi sulla dieta (tipicamente restrizioni di glutine e caseina), con 11 bambini (48%) sottoposti a diete restrittive al baseline, 14 (61%) e 12 (52%) rispettivamente dopo 12 e 24 mesi. Infine, anche i genitori hanno riportato l'uso regolare di farmaci: il 4% (1) al momento iniziale, il 17% (4) dopo 12 mesi, e il 4% (1) dopo 24 mesi. Sei bambini (26%) ricevevano iniezioni vitaminiche o alte dosi di vitamine al baseline; 10 (44%) e 7 (30%), rispettivamente, dopo 12 e 24 mesi.

Per quanto riguarda gli interventi omeopatici, 5 bambini (22%) li ricevevano al baseline; 2 (90%), dopo 12 mesi; e 1 (4%) dopo 24 mesi.

Gruppo di controllo.

I bambini nel gruppo di controllo hanno seguito la programmazione standard dei sistemi educativi locali per bambini piccoli con autismo. Perciò, nel corso dei 2 anni, hanno seguito diversi tipi di interventi studiati per migliorare le conseguen-

WWW.IPPOCRATES.IT



ze dell'autismo e accrescere il funzionamento, nessuno dei quali era intensivo o condotto su una base uno-a-uno per la maggior parte del tempo. L'intervento più frequentemente riportato è stata la terapia del linguaggio: 12 bambini (57%) la stavano seguendo al tempo della valutazione iniziale, il 67% (14) dopo 12 mesi, e il 48% (10) dopo 24 mesi. I genitori hanno riportato un uso frequente dei principi del TEACCH come parte dell'esperienza scolastica dei bambini (38%, 8 bambini, e 52%, 11 bambini rispettivamente dopo 12 e 24 mesi). In modo simile, erano spesso utilizzati anche il Picture Exchange Communication System (67%, 14 bambini e 76%, 16 bambini, rispettivamente dopo 12 e 24 mesi), il linguaggio dei segni o i Makaton Communication Systems (24%, n = 5 e 48%, n = 10, dopo 12 e 24 mesi), usati come sistemi di comunicazione alternativa. Anche gli interventi sulla dieta erano relativamente comuni, con il 14% (n = 3) che seguiva una dieta speciale al baseline, il 19% (n = 4) dopo 12 mesi, e il 29% (n = 6 bambini) dopo 24 mesi. È anche stato riportato l'uso di farmaci, di vitamine e di trattamenti omeopatici: il 5% (1 bambino) riceveva farmaci al baseline, il 24% (5) dopo 12 mesi, e il 19% (4) dopo 24 mesi. Nessun bambino al baseline faceva iniezioni vitaminiche o assumeva alte dosi di vitamine, mentre 1 solo bambino (5%) le prendeva al momento dell'assessment a 12 e 24 mesi. Infine, gli interventi omeopatici erano riportati per il 24% (5) del campione al momento della valutazione iniziale, e per un solo bambino (5%) dopo 12 e 24 mesi.

Nessun bambino nel gruppo di controllo frequentava una scuola al momento iniziale. Al tempo dell'assessment dopo 12 e 24 mesi, invece, in linea con la programmazione standard della amministrazione educativa, tutti avevano una sistemazione in una scuola. Dopo 12 mesi, il 48% (6) era in un contesto tradizionale; il 43% (9) era in una scuola per bambini con bisogni educativi speciali, e il 10% (2) era iscritto contemporaneamente a due scuole e passava metà del tempo in ciascuna scuola. Il numero medio di ore settimanali passate a scuola era simile per ogni bambino indipendentemente dalla sua sistemazione (una media di 15,3 ore passa-

WWW.IPPOCRATES.IT



te in un contesto tradizionale, 17 ore passate in una scuola per bisogni speciali, e 15 ore passate in sistemazioni miste). Dopo 24 mesi, il 48% (10 bambini) era in una scuola tradizionale per una media settimanale di 22,3 ore e il 52% era in scuole per bambini con bisogni speciali per 13,6 ore a settimana.

Nonostante i bambini nei gruppi di intervento e di controllo abbiano ricevuto livelli simili di intervento sul linguaggio e sulla comunicazione, è chiaro che questo pattern non è stato mantenuto durante i 24 mesi. In genere, come riportato successivamente, questo è stato causato dal fatto che l'intervento produceva effetti che riducevano il bisogno di altri interventi come il linguaggio dei segni o i Makaton.

Assessment psicometrici.

Le misurazioni degli esiti dei bambini e dei genitori sono state raccolte al momento del baseline, dopo 1 anno di intervento comportamentale o di programmazione standard (assessment a 12 mesi), e dopo 2 anni (assessment a 24 mesi). I test basati sulle prestazioni sono stati somministrati in un ambiente privo di distrazioni all'interno della casa familiare. Tutti i questionari sono stati spediti per posta ai genitori al tempo di ognuno dei tre assessment, e restituiti allo staff di ricerca poco dopo. Le interviste telefoniche condotte utilizzando la scala Vineland sono state compilate con chi si occupava primariamente dei bambini, approssimativamente 1 settimana prima delle visite per l'assessment dei bambini, tenuto nella casa familiare. Tali interviste duravano approssimativamente 60 minuti. Ad eccezione dell'Autism Diagnostic Interview, somministrata ai genitori in casa dall'ultimo autore al baseline, restanti misurazioni standardizzate dei risultati sono state effettuate dal terzo autore, usando un ordine uniforme di somministrazione: le Early Social Communication Scales, le Bailey Scales of Infant Development o la Stanford Binet e le Reynell Developmental Language Scales (somministrate

WWW.IPPOCRATES.IT



solo nei casi in cui il linguaggio del bambino avesse raggiunto un livello tale da permettergli di accedere agli item del test).

Risultati

Rassegna generale delle analisi sui dati di gruppo.

Per valutare l'efficacia dell'intervento comportamentale, si sono utilizzati i modelli ANCOVA. Poiché i gruppi non erano stati fatti attivamente coincidere al momento della valutazione iniziale, i punteggi di baseline sulle misurazioni dei risultati sono stati immessi come covarianti nelle analisi che, quindi, prevedevano un fattore tra gruppi: Gruppo (intervento, controllo) e un fattore di misurazione ripetuto, Tempo (esiti dopo 12 mesi vs. 24 mesi). In questi modelli, un effetto principale significativo di gruppo suggerirebbe ampi cambiamenti in un gruppo visti sia dopo 12 sia dopo 24 mesi. Un'interazione significativa Gruppo X Tempo starebbe a indicare l'assenza di differenze significative tra i gruppi a un certo punto nel tempo e la presenza di differenze significative tra i gruppi a un altro punto nel tempo.

L'assenza di effetti principali o di effetti di interazione suggerirebbe che i due gruppi non si distinguono né dopo 12 mesi né dopo 24 mesi.

Per facilitare il paragone con altre ricerche e per facilitare successivi paragoni meta-analitici, le tabelle 2 e 4 (relative ai bambini) e la tabella 5 (relativa ai genitori) mostrano i punteggi medi non adattati per le variabili sui risultati al momento della valutazione iniziale e dopo 12 e 24 mesi.

Esiti dei bambini.

La tabella 2 espone i risultati di QI, EM, i punteggi grezzi nei subdomini della

WWW.IPPOCRATES.IT



scala Vineland, e le misure ottenute con le Early Social Communication Scale nella iniziativa di attenzione congiunta e nella abilità di risposta alla attenzione congiunta.

Il modello ANCOVA 2X2, usato per analizzare gli esiti dopo 12 e 24 mesi, ha evidenziato che il gruppo d'intervento mostra un vantaggio sul gruppo di controllo in quattro di queste misure dopo 12 mesi, che è stato mantenuto dopo 24 mesi. Per il QI, c'è un effetto principale di gruppo significativo, $F(1,41) = 7,72$, $p = 0,008$, ma non c'è un effetto di interazione.

Allo stesso modo, l'EM mostra un significativo effetto principale di gruppo, $F(1,41) = 8,37$, $p = 0,006$, ma non c'è un effetto d'interazione. Sono stati trovati effetti di gruppo significativi (ma non di interazione) anche per le Abilità di vita quotidiana di Vineland, $F(1,41) = 6,32$, $p = 0,016$, e per le abilità motorie di Vineland, $F(1,41) = 4,49$, $p = 0,040$, ma non per i punteggi compositi di Vineland né per i domini della Socializzazione e della Comunicazione. In tutti i casi, i bambini che hanno ricevuto l'intervento comportamentale intensivo precoce hanno evidenziato performance migliori dei bambini nel gruppo di controllo.

Al momento della valutazione iniziale, 7 bambini (2 nel gruppo di intervento e 5 nel gruppo di controllo) non hanno potuto essere sottoposti alle Early Social Communication Scale, a causa di problemi comportamentali, disattenzione, o per l'assenza del permesso dei genitori alla videoregistrazione. In ogni caso, utilizzando i test di Mann-Whitney, non c'è stata la possibilità di identificare differenze d'EC o di misure dei risultati tra quei bambini che al baseline erano stati sottoposti ad assessment e quelli che non erano stati sottoposti.

Per i bambini sottoposti ad assessment, i modelli ANCOVA 2X2 per gli esiti dopo 24 mesi hanno evidenziato un effetto principale di gruppo significativo nella abilità di risposta all'attenzione congiunta in favore del gruppo d'intervento, $F(1,34) = 4,15$, $p = 0,049$, ma non hanno evidenziato effetti significativi nella iniziativa di attenzione congiunta. Nessuna delle due misure ha evidenziato, anche in questo

WWW.IPPOCRATES.IT



caso, interazioni significative, indicando così che gli effetti si erano stabiliti entro 12 mesi e che si mantenevano dopo 24 mesi.

Dato che le EC dei gruppi di intervento e di controllo al baseline (rispettivamente, 35,7 e 38,3 mesi) differivano significativamente e che l'EC era correlata con QI, EM, e alcuni punteggi della scala Vineland, sono state condotte ulteriori analisi con modello ANCOVA per queste variabili, usando EC come covariante aggiuntiva. Similmente, tre su quattro degli effetti di gruppo sopra descritti restano significativi a livelli convenzionali, ma l'effetto principale della scala Vineland per le Abilità motorie raggiunge solo una marginale significatività, $p = 0,057$.

Sfortunatamente, durante i test, alcuni bambini non hanno ottenuto un punteggio nelle Reynell Developmental Language Scales, in particolare durante la valutazione iniziale, a causa dei criteri normativi più alti, come richieste, prodotti per la terza edizione del test (Edwards et al., 1997). Per questo, i dati grezzi per questa misurazione appaiono incompleti. Di conseguenza, gli effetti di gruppo delle scale Reynell sono stati valutati usando un'analisi di frequenza in cui il numero di bambini con un punteggio nelle scale Reynell versus i bambini senza punteggio sono stati paragonati usando il test del chi quadro 2X2 nei tre momenti di valutazione. Le frequenze dei gruppi sono mostrate nella tabella 3. Questi test non evidenziano differenze tra i gruppi al baseline per la comprensione ma mostrano differenze significative in favore del gruppo d'intervento sia dopo 12 mesi, $X^2(1, N = 44) = 4,13, p = 0,042$, sia dopo 24 mesi, $X^2(1, N = 44) = 8,39, p = 0,004$. Allo stesso modo, i gruppi non differivano al baseline nei punteggi di linguaggio espressivo, mentre differenze significative sono state trovate a favore del gruppo d'intervento sia dopo 12 mesi, $X^2(1, N = 44) = 5,02, p = 0,025$, sia dopo 24 mesi, $X^2(1, N = 44) = 10,06, p = 0,002$.

La tabella 4 espone le valutazioni materne e paterne dei problemi comportamentali e dei comportamenti prosociali e autistici dei loro bambini. Le analisi della covarianza a 24 mesi rivelano un effetto di gruppo significativo per il comporta-

WWW.IPPOCRATES.IT



mento sociale positivo riportato dalle madri, $F(1,41) = 9,07$, $p = 0,004$, e un effetto di gruppo marginalmente significativo per i padri in questa scala, $F(1,28) = 4,09$, $p = 0,053$. In entrambi i casi, nel gruppo di intervento si riportano più comportamenti sociali positivi. Nessun altro effetto principale di gruppo significativo e nessun effetto di interazione è stato trovato per le restanti variabili relative ai bambini riportate dai genitori.

Esiti dei genitori.

La tabella 5 presenta i punteggi delle misurazioni del benessere materno e paterno nei 2 anni di durata della ricerca. L'unico dato significativo è un effetto di gruppo principale per la depressione paterna. I padri nel gruppo di intervento riportano più sintomi di depressione sia dopo 12 mesi sia dopo 24 mesi, come rivelato da un effetto principale significativo nell'analisi ANCOVA 2 (gruppo) X2 (tempo), $F(1,28) = 5,19$, $p = 0,031$.

Tabella 3. Frequenze dei bambini per gruppo con un punteggio nella scala di comprensione verbale di Reynell e nella scala di linguaggio espressivo ai tre momenti di valutazione

Assessment tempo/Gruppo	Scala di comprensione verbale di Reynell	
	Comprensione verbale	Linguaggio espressivo
Baseline		
Intervento	4	2
Controllo	3	1
Assessment a 12 mesi		
Intervento	19	17
Controllo	11	8
Assessment a 24 mesi		
Intervento	21	21
Controllo	11	10

Nota. Gruppo d'intervento: $n = 23$; gruppo di controllo: $n = 21$.

Tabella 4. Medie non adattate (DS) delle scale di valutazione genitoriale per il comportamento dei bambini per gruppo e momento di valutazione

Misure genitoriali		Baseline		Assessment a 12 mesi		Assessment a 24 mesi	
		Intervento	Controllo	Intervento	Controllo	Intervento	Controllo
Developmental Behavior Checklist	M	50,26 (22,75)	67,81 (18,77)	45,57 (18,79)	57,71 (22,61)	44,70 (24,20)	60,62 (24,72)
Punteggio totale	P	46,67 (22,15)	57,57 (15,67)	43,67 (16,28)	58,02 (21,05)	45,19 (20,94)	55,20 (19,44)
Developmental Behavior Checklist	M	22,22 (9,54)	31,14 (9,22)	20,39 (8,54)	25,38 (10,94)	18,91 (10,29)	26,76 (11,21)
Autism algorithm	P	22,33 (9,92)	26,29 (8,90)	19,53 (8,23)	25,12 (10,43)	19,50 (8,80)	24,00 (11,60)
Nisonger Child Behavior Rating Form:	M	10,57 (4,24)	9,29 (3,47)	15,22 (4,09)	11,00 (4,10)	15,30 (4,69)	11,86 (4,84)
Comportamento sociale positivo	P	8,94 (3,47)	8,73 (3,67)	13,06 (3,04)	10,40 (4,75)	12,69 (4,06)	11,20 (5,19)
Autism Screening Questionnaire	M	19,26 (4,93)	21,14 (5,47)	16,43 (5,56)	20,14 (6,55)	15,96 (5,63)	19,29 (7,22)
	P	20,88 (4,54)	21,07 (6,41)	18,44 (5,54)	20,73 (7,45)	19,88 (6,16)	19,47 (7,46)

Nota. Madri del gruppo d'intervento (M): n = 23; madri del gruppo di controllo: n = 21. Padri del gruppo d'intervento (P): n = 16; padri del gruppo di controllo: n = 15.

Tabella 5. Medie non adattate (DS) delle misure self-report di benessere genitoriale per gruppo e momento di valutazione

Misura		Baseline		Assessment a 12 mesi		Assessment a 24 mesi	
		Intervento	Controllo	Intervento	Controllo	Intervento	Controllo
Stress (QRS-F)	Madre	6,43 (4,29)	7,24 (4,19)	7,48 (4,70)	6,48 (4,08)	8,52 (2,97)	8,29 (2,17)
	Padre	6,81 (4,26)	5,87 (3,19)	7,88 (4,27)	5,53 (3,00)	8,94 (3,62)	7,60 (2,72)
HADS ^a	Madre	9,35 (4,21)	9,76 (4,87)	10,48 (5,12)	8,52 (4,72)	9,13 (4,53)	8,62 (4,43)
	Padre	8,89 (4,76)	7,93 (3,67)	7,87 (4,60)	7,00 (3,16)	8,38 (4,08)	8,13 (4,10)
Depressione	Madre	8,13 (4,12)	8,71 (3,68)	8,04 (5,80)	7,19 (4,26)	7,09 (4,97)	6,90 (3,94)
	Padre	5,69 (4,42)	7,07 (3,61)	6,56 (5,25)	5,27 (2,99)	7,00 (5,34)	5,93 (3,83)
Percezioni positive (KIPP-PC)	Madre	127,30 (27,00)	133,10 (19,37)	127,39 (23,79)	133,43 (18,23)	128,00 (19,62)	132,43 (17,94)
	Padre	120,94 (20,23)	124,73 (19,66)	122,56 (19,70)	131,40 (15,68)	122,81 (22,47)	128,53 (9,70)

^aQuestionnaire on Resources and Stress Friedrich short form.

^bHospital Anxiety and Depression Scale.

^cKansas Inventory of Parental Perceptions Positive Contributions subscale.

Analisi degli esiti per ogni singolo bambino

Poiché nelle precedenti ricerche sull'intervento comportamentale intensivo precoce il QI era considerato la principale variabile tra i risultati, e poiché nella presente ricerca ha evidenziato il più forte cambiamento in positivo come risultato dell'intervento, il QI è stato scelto come focus per l'analisi del cambiamento di ogni singolo bambino. Prima di tutto, è stata calcolata la dimensione dell'effetto di gruppo per il QI dopo 24 mesi per rinforzare la significatività clinica dell'effetto generale dell'intervento. La stima delle dimensioni dell'effetto è basata sulla statistica detta d di Cohen. In particolare, la differenza media dei cambiamenti di punteggio di QI tra i due gruppi dopo 24 mesi è usata come numeratore e il raggruppamento di DS dei cambiamenti di punteggio di QI dei due gruppi è usato come denominatore usando la formula di Cohen (J. Cohen, 1988). La dimensione dell'effetto per il QI dopo 24 mesi, calcolata usando questo metodo, è di 0,77, indicando una differenza relativamente grande tra i gruppi (J. Cohen, 1988, considera una d di 0,80 la soglia per un effetto grande).

Per analizzare se questa differenza a livello di gruppo si riflettesse sugli esiti dei singoli bambini, è stato applicato il criterio stabilito da Jacobson e Truax (1991) per stabilire la soglia del cambiamento con attendibilità e significatività clinica nei gruppi di intervento e di controllo. Il calcolo di un punteggio indice di cambiamento affidabile può essere usato per stabilire il cambiamento di QI oltre il quale c'è il 95% di possibilità che il cambiamento osservato non derivi da inaffidabilità di misurazione e/o da una variabilità sottostante nei punteggi. Per calcolare il punteggio indice di cambiamento affidabile sono indispensabili due dati: la DS dei QI e la stabilità della misura di QI. Nel processo di identificazione di questi valori è stato usato un approccio conservativo. Non essendo disponibili fonti idonee di informazione normativa relative alla variabilità e alla stabilità del QI in bambini autistici molto piccoli, sono stati utilizzati i dati del presente cam-

pione di bambini piuttosto che attenersi alle informazioni normative proposte dai test Stanford-Binet o Bayley (es., la DS per il QI è normalmente 15). Prima di tutto, sono state identificate le DS per il QI per il nostro campione composto di 44 bambini al baseline. In seguito è stata valutata la stabilità del QI in bambini piccoli con autismo durante i 2 anni di ricerca, usando la correlazione tra i QI al baseline e dopo 2 anni solamente per il gruppo di controllo (non trattato). Questo ha dato origine alla miglior valutazione disponibile di stabilità tipica nel QI di bambini piccoli con autismo. Sostituendo questi valori nella formula di Jacobson e Truax (1991, p. 14) si è rivelato un indice di cambio affidabile al livello standard di 1,96, equiparato a un cambiamento di 23,94 punti di QI; il QI di un bambino dopo 2 anni doveva deviare da quello ottenuto all'inizio almeno di tale ammontare prima che il cambio potesse essere considerato affidabile; la figura 1 mostra i cambiamenti di punteggio di QI per ciascun bambino. Questo riflette l'effetto generale di gruppo, in cui un numero maggiore di bambini nel gruppo di intervento evidenzia nel tempo un aumento di QI rispetto al gruppo di controllo. Inoltre, mostra che 6 bambini nel gruppo di intervento (26%) hanno raggiunto un miglioramento affidabile nei 2 anni di ricerca. Anche 3 bambini (14%) del gruppo di controllo sono migliorati, ma allo stesso tempo 3 bambini di questo gruppo (quasi 4) hanno avuto un peggioramento significativo.

Anche se l'uso dell'indice di cambio affidabile migliora la metodologia per stabilire i migliori risultati usati in studi precedenti ottenuti con l'uso di valutazioni quantificabili per ogni singolo bambino, questo non è sufficiente a stabilire il significato clinico dei risultati.

Il QI di un bambino potrebbe cambiare in modo affidabile senza per questo uscire dalla gamma di punteggi della grave invalidità. Perciò, è utile identificare un QI oltre il quale si considererebbe un bambino come appartenente alla popolazione tipica più che alla popolazione di bambini da cui è stato tratto il campione. Jacobson e Truax (1991) hanno discusso vari criteri per stabilire il significato clini-

WWW.IPPOCRATES.IT



co dei risultati. L'uso del loro Criterio C è raccomandabile quando, come nel presente caso, è possibile identificare la distribuzione non clinica di una variabile (es., QI) e ottenere informazioni ragionevoli sulla distribuzione della variabile in una popolazione clinica. Secondo il Criterio C, il QI che indica cambiamento clinico è a mezza via tra il QI medio dei bambini del presente campione al baseline e la media della popolazione tipica (100). Questo QI è di 81,93. Dopo 2 anni, 5 dei 6 bambini nel gruppo di intervento che hanno ottenuto un cambiamento affidabile hanno raggiunto anche un cambiamento clinicamente significativo (es., il loro QI superava l'81,93); tutti e 3 i bambini nel gruppo di controllo che hanno ottenuto miglioramenti affidabili hanno ottenuto anche un cambiamento clinicamente significativo. Nessun altro bambino in entrambi i gruppi ha ottenuto un cambiamento che fosse sia affidabile che clinicamente significativo.

Analisi esplorative delle variabili associate con il cambiamento di QI

La figura 1 è una rappresentazione evidente dell'impatto dell'intervento comportamentale intensivo precoce; molti più bambini nel gruppo di intervento che nel gruppo di controllo hanno ottenuto risultati positivi. Questo, però, porta a chiedersi quali fattori siano correlati al successo dell'intervento. Per valutarlo, sono stati valutati dati descrittivi sull'indice di cambiamento affidabile distinguendo tra rispondenti (i 6 bambini che hanno ricevuto l'intervento comportamentale intensivo precoce il cui QI è cambiato positivamente in modo affidabile) e non rispondenti

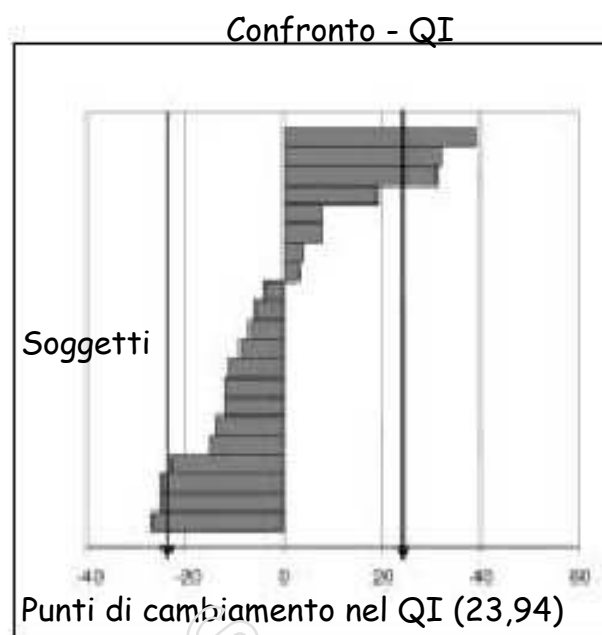
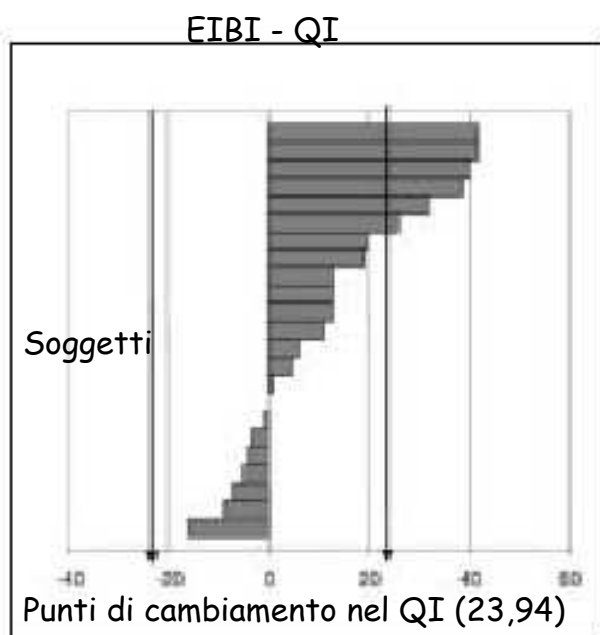


Figura 1. Cambiamenti di QI nei bambini dei gruppi di intervento e di controllo. Le barre orizzontali indicano i cambiamenti di QI tra il momento di valutazione iniziale e l'assessment dopo 24 mesi per ciascun bambino nel gruppo d'intervento (grafico a sinistra) e nel gruppo di controllo (grafico a destra). In entrambi i grafici, le linee verticali nere con le frecce indicano il più alto e il più basso limite per un cambiamento affidabile di QI calcolato secondo il criterio di Jacobson e Truax (1991). EIBI = early intensive behavioral intervention (intervento comportamentale intensivo precoce).

(i 6 bambini del gruppo di controllo il cui QI è diminuito; cf. Sherer e Schreiberman, 2005). Nonostante sia qui usato il termine non rispondenti, i dati presentati in figura 1 suggeriscono che il QI di questi 6 bambini sia diminuito meno di quanto ci si potesse aspettare in confronto ai bambini che hanno ottenuto i peggiori risultati nel gruppo di controllo. Si dovrebbe dunque ricordare la relatività del termine. La tabella 6 espone i punteggi medi per tutte le variabili continue al momento della valutazione iniziale per questi due piccoli sottogruppi di bambini. Le medie sono state paragonate calcolando la *d* di Cohen per ciascuna misurazione. Seguendo le regole generali suggerite da Cohen (1985), le differenze tra l'indice di cambiamento affidabile dei rispondenti e non rispondenti sono state prese in considerazione solo se eccedevano 0,50 (effetto medio) e 0,80 (effetto grande).

Queste analisi esplorative indicano che al momento della valutazione iniziale i bambini che hanno risposto più positivamente all'intervento comportamentale differivano dai soggetti che non rispondevano al trattamento nei seguenti modi: hanno punteggi più alti di QI, EM, Vineland (Composito, Comunicazione, Abilità sociali); hanno punteggi più bassi nelle abilità motorie di Vineland, più problemi comportamentali rivelati sia dalle madri sia dai padri tramite il Developmental Behavior Checklist Autism Algorithm; e hanno ricevuto meno ore di intervento durante il secondo anno.

Tabella 6.

Medie al baseline (DS) e dimensioni dell'effetto sulle misurazioni dei bambini per i soggetti che rispondono al trattamento in modo più o meno positivo nel gruppo di intervento

QI	65,00	19,81	47,67	11,55	1,07
Bvi	22,50	6,98	18,00	4,82	0,75
\ABS'					
Compositi	107,17	12,75	99,50	12,28	0,61
Comunicazione	24,17	8,66	16,17	5,04	1,13
Vita quotidiana	21,17	6,34	21,17	3,82	0,00
Sociale	28,67	3,20	25,67	2,50	1,04
Motoria	33,17	3,54	36,50	6,38	-0,65
ASQ ^b					
Madri	21,67	5,28	21,17	4,49	0,04
Padri	22,00	7,21	22,67	3,50	-0,14
DBC ^c totale					
Madri	69,67	18,24	51,83	24,05	0,84
Padri	73,67	9,29	49,80	24,57	1,12
DBC ASA ^d					
Madri	28,67	8,96	23,93	10,80	-0,49
Padri	34,00	8,00	24,40	9,89	-1,02
Ore d'intervento					
Anno 1	970,08	342,11	1009,88	113,92	-0,16
Anno 2	760,58	533,53	1053,42	356,97	-0,65

'Punteggi Grezzi nelle Vineland Adaptive Behavior Scale. ^bAutism Screening Questionnaire. ^cDevelopmental Behavior Checklist. ^dAutism Screening Algorithm.

- a) Punteggi Grezzi nelle Vineland Adaptive Behavior Scale.
- b) Autism Screening Questionnaire.
- c) Developmental Behavior Checklist.
- d) Autism Screening Algorithm.

Sono stati inoltre considerati i dati di baseline dei 3 bambini nel gruppo di controllo il cui QI è aumentato in modo affidabile e clinicamente significativo nei 2 anni dello studio. Poiché il loro numero era molto piccolo, non è stato possibile completare paragoni statistici formali, ma un'ispezione visiva dei loro punteggi in tutte le misure al baseline non mostra un andamento che possa valere come possibile spiegazione di un miglioramento significativo.

Discussione

I dati di questo studio controllato di 2 anni sull'intervento comportamentale intensivo precoce messo a confronto col trattamento tipico nel sistema educativo del Regno Unito mostrano un vantaggio a favore del gruppo di intervento. In accordo con altre ricerche di campo sull'efficacia in questa area, sono stati trovati forti effetti principali di gruppo per QI, EM, Linguaggio espressivo e Comprensione del linguaggio di Reynell, e Abilità di vita quotidiana di Vineland dopo 24 mesi di intervento. Anche se meno significativi, sono stati inoltre trovati cambiamenti significativi nelle Abilità motorie di Vineland e nella abilità di risposta all'attenzione congiunta, misurati con le Early Social Communication Scales. Così come in Cohen e colleghi (2006), sono stati utilizzati i metodi ANCOVA per valutare le interazioni Gruppo X Tempo ed evidenziare una maggiore differenziazione di prestazione con il proseguire dell'intervento; e, così come nello studio di Cohen e colleghi, non è stata trovata alcuna interazione.

Anche se rispetto a ricerche precedenti (H. Cohen et al., 2006; Howard et al., 2005) è stata inclusa una gamma più ampia di misurazione dei risultati, l'impatto dell'intervento comportamentale si nota quasi esclusivamente sulle abilità cognitive e linguistiche dei bambini e sul loro funzionamento adattivo. Eccezionalmente, i bambini nel gruppo di intervento evidenziano forti miglioramenti nelle valutazioni genitoriali dei comportamenti sociali positivi, ma non si evidenziano simili cambiamenti nei resoconti genitoriali sui problemi comportamentali dei bambini o

WWW.IPPOCRATES.IT



sulle stime dei loro comportamenti autistici. Inoltre, c'è un minor numero di marcati miglioramenti nell'attenzione congiunta. Sallows e Graupner (2005), usando i punteggi nei domini dell'Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R), evidenziano inoltre riduzioni nei sintomi autistici relativi ai deficit sociali e comunicativi, ma non trovano cambiamenti nei comportamenti ritualistici. In ogni caso, non è chiaro se questi punteggi sarebbero cambiati senza l'intervento intensivo poiché non c'era un gruppo di controllo con un intervento non-intensivo.

L'assenza di una riduzione relativa nel riportare comportamenti problematici a seguito dell'intervento comportamentale intensivo precoce è in qualche modo sorprendente. Si dovrebbe in ogni caso ricordare che, poiché l'intervento si focalizza primariamente su obiettivi educativi, un'analisi funzionale dettagliata e interventi centrati sui valori funzionali per i comportamenti problematici non sono le componenti principali. Tuttavia, vista la nota associazione tra i problemi di comportamento e la gravità del funzionamento cognitivo e adattivo, specialmente le abilità linguistiche/comunicative (es., McClintock, Hall e Oliver, 2003), ci si possono aspettare benefici positivi sul comportamento del bambino a seguito di un intervento comportamentale precoce. È possibile che l'accresciuta abilità dei bambini nel gruppo di intervento di obbedire alle richieste di attenzione abbia portato all'aumento delle percezioni positive genitoriali dei comportamenti prosociali dei figli. Visto il ruolo di queste abilità pilota nel facilitare lo sviluppo linguistico e cognitivo (Mundy, 1995; Mundy e Crowson, 1997; Mundy e Neal, 1997), questa è una direzione importante per le ricerche future.

Il presente studio inoltre amplia le ricerche precedenti includendo una dettagliata analisi dei risultati genitoriali e i primi dati sui padri. Come ci si poteva aspettare in base alle precedenti ricerche trasversali (Hastings e Johnson, 2001), i benefici dell'intervento comportamentale intensivo precoce sui bambini non aumentavano il carico dei genitori. Non si trova evidenza di un aumento di stress differenziale o di maggiori problemi di salute mentale tra le madri o i padri del

WWW.IPPOCRATES.IT



gruppo di intervento, anche se questi ultimi riportano più sintomi di depressione nel corso dello studio. Questi padri, ad ogni modo, mostrano meno sintomi di depressione al momento della valutazione iniziale rispetto a quelli del gruppo di controllo; quindi, il risultato potrebbe, almeno in parte, essere un artefatto di una forte regressione all'effetto principale dopo 12 e 24 mesi. Questi risultati sono importanti, perché le difficoltà nell'assestamento genitoriale potrebbero essere considerate a ragione come una controindicazione per un intervento comportamentale svolto a casa che richiede il coinvolgimento quotidiano della famiglia. In generale, la dimensione dell'effetto per l'impatto dell'intervento sui bambini è sostanziale e clinicamente significativa a livello di gruppo (la *d* di Cohen si avvicinava a 0,80 per il QI dopo 2 anni). H. Cohen e colleghi (2006) non lo riportarono, ma la dimensione dell'effetto sul QI nella loro ricerca - simile nel disegno al presente studio è leggermente superiore a quello ottenuto nella presente ricerca (calcolato secondo i dati presentati in Cohen e colleghi come circa 0,90). Perciò, i nostri risultati sono paragonabili, nonostante gli interventi siano stati condotti in un periodo di tempo più breve e con una minore quantità di ore di intervento. In studi precedenti, è stato raramente quantificato l'impatto dell'intervento sui singoli soggetti. Al contrario, i ricercatori tendevano a riferire il numero di bambini con punteggi entro la gamma della normalità nelle misurazioni standard. Nel presente studio, si sono ampliate le conoscenze usando l'indice statistico del cambio affidabile di Jacobson e Truax (1991) come criterio preciso per il "miglior risultato". Questo criterio rivela che il 26% dei bambini che ha ricevuto l'intervento comportamentale intensivo precoce ha raggiunto un cambiamento di QI statisticamente affidabile, e nessuno ha evidenziato una regressione di QI altrettanto affidabile. Nel gruppo di controllo, il 14% è migliorato significativamente ma, sfortunatamente, un altro 14% è peggiorato significativamente.

Il cambiamento statistico affidabile serve anche come criterio di principio per identificare le variabili che hanno in comune quei bambini che più hanno benefi-

WWW.IPPOCRATES.IT



ciato dell'intervento comportamentale intensivo precoce. Le analisi esplorative dell'indice di cambio affidabile, definendo i rispondenti più e meno positivi, hanno identificato correlazioni di cambiamento che erano già state identificate in studi precedenti (es., H. Cohen et al., 2006; Sallows e Graupner, 2005). Queste includono differenze nei punteggi più alti di funzionamento intellettuale e nelle abilità di comportamento adattivo al momento della valutazione iniziale (inclusi il punteggio totale, la comunicazione e le abilità sociali) nel gruppo dei rispondenti positivi. Sono state inoltre osservate differenze non prima identificate. Oltre ad abilità motorie più povere, i rispondenti più positivi presentano più problemi comportamentali e sintomi autistici più gravi al momento della valutazione iniziale. Questa relazione, apparentemente paradossale, potrebbe forse essere emersa se le misurazioni usate fossero state più sensibili al comportamento di quei bambini con un ritardo dello sviluppo meno grave. Non ci sono ovvie spiegazioni per il cambiamento significativo positivo di QI osservato nei 3 bambini del gruppo di controllo il cui QI è migliorato significativamente nei 2 anni.

I presenti risultati indicano che l'intervento comportamentale può essere efficace per bambini piccoli con autismo nel contesto educativo pre-scolare del Regno Unito, un sistema in cui, al contrario degli Stati Uniti, gli amministratori e gli educatori non hanno familiarità con l'intervento comportamentale intensivo precoce e che, in qualche modo, non lo supportano istituzionalmente. Per esempio, i genitori negli Stati Uniti beneficiano delle Leggi Pubbliche 94-142 (1975) e 99-457 (1986), che stabiliscono il diritto ai servizi d'intervento precoce per i bambini da 0 a 3 anni (l'Handicapped Infants and Toddlers Program: Part H). Il Regno Unito non ha una simile legislazione e molte delle sue autorità educative, durante il tempo della ricerca, si sono opposte di routine ai tentativi genitoriali di accedere all'intervento comportamentale intensivo precoce tramite programmazione pubblica (Johnson e Hastings, 2002). Per queste ragioni, non è stato possibile esercitare un alto grado di controllo su molti aspetti pratici dell'attuazione

WWW.IPPOCRATES.IT



dell'intervento. Per esempio, i tutori che conducevano i servizi basati nelle case, non erano assunti dai ricercatori ma dalle autorità educative o dalle famiglie dei bambini. Ci sono state molte sostituzioni nello staff, i nuovi tutori erano difficili da ottenere e la loro formazione richiedeva tempo. Perciò, nonostante fosse stato stabilito l'obiettivo di 40 ore settimanali di intervento per 2 anni per il gruppo di intervento, gli esiti positivi si sono ottenuti con una media di sole 25,6 ore a settimana. Tuttavia, gli esiti positivi attesi sono stati ottenuti nonostante queste difficoltà, e questo vale come dimostrazione convincente dell'efficacia della ricerca.

Così come la maggior parte delle ricerche applicate sull'intervento comportamentale intensivo precoce, il presente studio presenta una serie di limitazioni. Innanzitutto, non essendo una ricerca a controllo casuale, le poche differenze potenzialmente rilevanti notate tra i gruppi al momento della valutazione iniziale (es., l'EC all'inizio del trattamento) si sono dovute controllare statisticamente anziché sperimentalmente. È perciò possibile che, pur cercando di gestire le differenze pre-esistenti tra i gruppi nel modo più rigoroso possibile in uno studio di questo tipo, alcune possano essere passate inosservate. Inoltre, differenze tra i gruppi non considerate prima dell'intervento potrebbero manifestarsi anche in condizioni d'assegnamento casuale con campioni della grandezza tipicamente usata nella ricerca sull'intervento precoce (Drew et al., 2002). Ad ogni modo, sarebbe stato molto difficile eseguire uno studio con controllo casuale in questo caso, poiché la variabile indipendente è un intervento educativo esteso che non può essere condotto con metodo "cieco" e che viene corroborato da una vasta letteratura. Viste le difficoltà nel trovare un trattamento placebo ugualmente credibile, si può ragionevolmente aspettarsi che molti genitori i cui bambini sono stati casualmente assegnati al gruppo di controllo li ritirerebbero dallo studio, e una percentuale di questi cercherebbe l'intervento da qualche altra parte (Lord, Wagner et al., 2005). In queste circostanze, l'intenzione di trattare le analisi potrebbe essere

WWW.IPPOCRATES.IT



fuorviante. Forse per queste ragioni, gli studi recentemente pubblicati in questa area (es., H. Cohen et al., 2006; Howard et al., 2005) hanno evitato la randomizzazione.

Secondo la procedura, le ricerche a controllo casuale di solito includono un intervento preciso, spesso descritto in un manuale; un criterio di selezione dei soggetti severo e un assessment cieco. Il trattamento basato su un protocollo rigido non è una caratteristica del presente studio, in parte perché si è scelto di adottare ampi criteri d'inclusione. Non sarebbe stato pratico produrre un manuale dettagliato che si occupasse di tutte le possibili esigenze; inoltre, i ricercatori non erano in posizione da determinare il corso della terapia per tutti i bambini nel gruppo di intervento che, come visto, ricevevano i servizi da diverse fonti. Tuttavia, tutti gli interventi sono stati supervisionati da clinici esperti con una conoscenza dettagliata della programmazione comportamentale, e siamo convinti della qualità di gestione del programma. Nei fatti, i problemi pratici di fedeltà del trattamento, soprattutto dovuti alla scarsità di tutor, sono molto più significativi di quelli relativi alla coerenza del trattamento. Per quanto riguarda la potenziale parzialità degli esaminatori, chi ha condotto la valutazione era indipendente dal team d'intervento e formalmente "cieco", ma, sempre per ragioni pratiche, la valutazione è avvenuta nelle case dei bambini, e in qualche caso indizi fisici o comportamentali potrebbero aver rivelato il tipo di trattamento che stavano ricevendo. Si crede che sia difficile controllare indizi di questo tipo in qualsiasi studio dove c'è una vasta conoscenza professionale sulla natura dell'intervento. È inoltre da considerarsi la questione delle ristrette dimensioni del campione nel presente studio. Anche se si è riusciti a reclutare un campione di grandezza simile a quelli riportati in altre ricerche di valutazione sull'intervento comportamentale intensivo precoce, esiste un problema generale di potere statistico in studi di questo tipo. Qui sono da considerarsi due questioni in particolare. Primo, sono state trovate differenze d'effetto principale negli esiti chiave dei bambini, ma

WWW.IPPOCRATES.IT



non sono stati trovati termini d'interazione significativa coi modelli ANCOVA 2X2. Questo risultato potrebbe significare, come hanno concluso H. Cohen e colleghi (2006), che gli effetti dell'intervento si erano già stabiliti dopo 12 mesi. Non è comunque possibile trarre tale conclusione in modo certo: è possibile che il cambiamento nei secondi 12 mesi sia stato meno marcato ma che in un campione più largo si sarebbe potuto vedere che il vantaggio per il gruppo di intervento continuava a crescere. È necessario condurre ulteriori ricerche su questo argomento. Una seconda questione è che è stata trovata molto poca evidenza di effetti negativi sul benessere genitoriale a causa del coinvolgimento nell'intervento comportamentale intensivo precoce, ma tali effetti potrebbero forse essere osservati in un campione più ampio. Anche se questa possibilità non può essere eliminata, è importante considerare che il presente campione mostra effetti significativi o marginali che con più potere avrebbero chiaramente potuto diventare significativi. È inoltre importante il fatto che i nostri risultati concordino con quelli di tutti gli studi esistenti i cui ricercatori hanno affrontato questa domanda usando vari disegni; nessuno di questi studi evidenzia un effetto negativo sull'assetamento dei membri della famiglia. La restrizione delle dimensioni del campione inoltre permette solo analisi esplorative della grandezza dell'effetto delle differenze tra quei bambini nel gruppo di intervento che hanno risposto più positivamente e quelli che sono peggiorati. Ad ogni modo, questo metodo ha qualche potenziale per l'applicazione in altri studi sui risultati e potrebbe contribuire al processo laddove l'intervento sia focalizzato su quei bambini e quelle famiglie le cui caratteristiche suggeriscono che potrebbero massimamente beneficiare dell'intervento.

In conclusione, il presente studio indica che l'intervento per l'autismo infantile basato sull'analisi del comportamento applicata e condotta intensivamente a casa durante il periodo pre-scolare può portare a cambiamenti significativi nel funzionamento dei bambini senza portare con sé un impatto negativo sugli altri membri

WWW.IPPOCRATES.IT



della famiglia, anche quando condotto in circostanze che per ragioni pratiche non permettono la sua attuazione ottimale. Rimangono in ogni caso domande su entrambi i fattori che meglio prevedono l'efficacia dell'intervento e l'impatto a lungo termine degli effetti osservati. Anche se genitori, educatori e fautori della politica tendono a chiedere se l'intervento comportamentale intensivo precoce "funziona" o "non funziona", potrebbe rivelarsi più idoneo porsi, invece, domande più modeste ma potenzialmente più accessibili riguardo alla selezione dei bambini per l'intervento intensivo: l'identificazione e la valutazione dei curriculum e dei metodi di insegnamento idonei, e le forme più efficaci di programmi di mantenimento per i bambini alla fine di un prefissato periodo d'intervento precoce.

Bibliografia

- American Psychiatric Association. (1994). *Diagnostic and statistical manual of mental disorders* (4th ed.). Washington, DC: Author.
- Anderson, S.R., Avery, D.L., DiPietro, E.K., Edwards, G.L., & Christian, W.P. (1987). Intensive home-based early intervention with autistic children. *Education and Treatment of Children, 10*, 352-366.
- Bayley, N. (1993). *Bayley Scales of Infant Development - Second Edition*. San Antonio, TX: Psychological Corp.
- Behr, S.K., Murphy, D.L., & Summers, J.A. (1992). *User's manual: Kansas Inventory of Parental Perceptions (KIPP)*. Lawrence: University of Kansas, Beach Center on Families and Disability.
- Berument, S.K., Rutter, M., Lord, C., Pickles, A., & Bailey, A. (1999). Autism Screening Questionnaire: Diagnostic validity. *British Journal of Psychiatry, 175*, 444-451.
- Bibby, P., Eikeseth, S., Martin, N.T., Mudford, O.C., & Reeves, D. (2001). Progress and outcomes for children with autism receiving parent-managed intensive interventions. *Research in Developmental Disabilities, 22*, 425-447.
- Birnbrauer, J.S., & Leach, D.J. (1993). The Murdoch early intervention program after two years. *Behaviour Change, 10*, 63-74.
- Burack, J.A., & Volkmar, F.R. (1992). Development of low- and high-functioning autistic children. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 33*, 607-616.
- Carter, A.S., Volkmar, F.R., Sparrow, S.S., Wang, J.J., Lord, C., Dawson, G., Fombonne, E., Loveland, K., Mesibov, G., & Schopler, E. (1998). The Vineland Adaptive Behavior Scales: Supplementary norms for individuals with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 28*, 287-302.
- Cohen, H., Amerine-Dickens, M., & Smith, T. (2006). Early intensive behavioral treatment: Replication of the UCLA model in a community setting. *Developmental and Behavioral Pediatrics, 27*, S145-S155.
- Cohen, J. (1988). *Statistical power analysis for the behavioral sciences* (2nd ed.). Hillsdale, NJ: Erlbaum.
- Drew, A., Baird, G., Baron-Cohen, S., Cox, A., Slonims, V., Wheelwright, S., Swettenham, J., Berry, B., & Charman, T. (2002). A pilot randomised control trial of a parent training intervention for pre-school children with autism: Preliminary findings and methodological challenges. *European Child and Adolescent Psychiatry, 11*, 266-272.
- Edwards, S., Fletcher, P., Garman, M., Hughes, A., Letts, C., & Sinka, I. (1997). *The Reynell Developmental Language Scales III: The University of Reading Edition*. Windsor: NFER Nelson.
- Eikeseth, S., Smith, T., Jahr, E., & Eldevik, S. (2002). Intensive behavioral treatment at school for 4- to 7-year-old children with autism. *Behavior Modification, 26*, 49-68.
- Einfeld, S.L., & Tonge, B.J. (1995). The Developmental Behaviour Checklist: The development and validation of an instrument to assess behavioral and emotional disturbance in children with mental retardation. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 25*, 81-104.

- Einfeld, S.L., & Tonge, B.J. (2002). *Manual for the Developmental Behaviour Checklist* (2nd ed.) University of New South Wales, School of Psychiatry, Melbourne; Centre for Developmental Psychiatry, Monash University, Clayton, Victoria.
- Friedrich, W.N., Greenberg, M.T., & Crnic, K. (1983). A Short Form of the Questionnaire on Resources and Stress. *American Journal of Mental Deficiency*, 88, 41-48.
- Glidden, L.M. & Floyd, F.J. (1997). Disaggregating parental depression and family stress in assessing families of children with developmental disabilities: A multi-sample analysis. *American Journal on Mental Retardation*, 102, 250-266.
- Green, G., Brennan, L.C., & Fein, D. (2002). Intensive behavioral treatment for a toddler at high risk for autism. *Behavior Modification*, 26, 69-102.
- Hastings, R.P. (2003a). Behavioral adjustment of siblings of children with autism engaged in applied behavior analysis early intervention programs: The moderating role of social support. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 33, 141-150.
- Hastings, R.P. (2003b). Child behaviour problems and partner mental health as correlates of stress in mothers and fathers of children with autism. *Journal of Intellectual Disability Research*, 47, 231-237.
- Hastings, R.P., & Brown, T. (2002). Behavior problems of autistic children, parental self-efficacy, and mental health. *American Journal on Mental Retardation*, 207, 222-232.
- Hastings, R.P., & Johnson, E. (2001). Stress in UK families conducting intensive home-based behavioral intervention for their young child with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 31, 327-336.
- Howard, J.S., Sparkman, C.R., Cohen, H.G., Green, G., & Stanislaw, H. (2005). A comparison of intensive behavior analytic and eclectic treatments for young children with autism. *Research in Developmental Disabilities*, 26, 359-383.
- Jacobson, N. S., & Truax, P. (1991). Clinical significance: A statistical approach to defining meaningful change in psychotherapy research. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 59, 12-19.
- Johnson, E., & Hastings, R.P. (2002). Facilitating factors and barriers to the implementation of intensive home-based behavioural intervention for young children with autism. *Child: Care, Health and Development*, 28, 123-129.
- Kendall, P.C., Chu, B.C., Gifford, A., Hayes, C., & Nauta, M. (1998). Breathing life into a manual: Flexibility and creativity with manual-based treatments. *Cognitive and Behavioral Practice*, 5, 177-198.
- Lord, C., Rutter, M., & LeCouteur, A. (1994). Autism Diagnostic Interview Revised: A revised version of a diagnostic interview for caregivers of individuals with possible pervasive developmental disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 24, 659-685.
- Lord, C., Wagner, A., Rogers, S., Szatmari, P., Aman, M., Charman, T., Dawson, G., Durand, M.V., Grossman, L., Guthrie, D., Harris, S., Kasari, C., Marcus, L., Odom, S., Pickles, A., Scahill, L., Shaw, E., Siegel, B., Sigman, M., Stone, W., Smith, T., & Yoder, P. (2005). Challenges in evaluating psychosocial interventions for autistic spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 35, 695-708.
- Lovaas, I.O. (1987). Behavioral treatment and normal educational and intellectual functioning in young autistic children. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 55, 3-9.
- Lovaas, I.O. (1993). *Teaching developmentally disabled children: The me book*. Austin, TX: Pro-Ed.
- McClintock, S., Hall, S., & Oliver, C. (2003). Risk markers associated with challenging behaviours in people with intellectual disabilities: A meta-analytic study. *Journal of Intellectual Disability Research*, 47, 405-416.
- McEachin, J.J., Smith, T., & Lovaas, O.I. (1993). Long-term outcome for children with autism who received early intensive behavioral treatment. *American Journal on Mental Retardation*, 97, 359-372.
- McEvoy, R., Rogers, S., & Pennington, B. (1993). Executive function and social communication deficits in young autistic children. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 34, 563-578.
- Mundy, P. (1995). Joint attention and social-emotional approach behaviour in children with autism. *Development and Psychopathology*, 7, 63-82.
- Mundy, P., & Crowson, M. (1997). Joint attention and early social communication: Implications for research on intervention with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 27, 653-676.
- Mundy, P., Hogan, A., & Dohering, P. (1996). *A preliminary manual for the abridged Early Social Communication Scales*. Coral Gables, FL: University of Miami. Available at <http://www.psy.miami.edu/faculty/pmundy>
- Mundy, P., & Neal, R. A. (1997). Neural plasticity, joint attention, and a transactional social-orienting model of autism. *International Review of Research in Mental Retardation*, 23, 139-168.
- Mundy, P., Sigman, M., Ungerer J., & Sherman, T. (1986). Social interactions of autistic, mentally retarded and normal children and their caregivers. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 27, 647-656.
- Partington, J. W., & Sundberg, M. L. (1998). *The Assessment of Basic Language and Learning Skills: An assessment, curriculum guide, and tracking system for children with autism or other developmental disabilities*. Danville, CA: Behavior Analysts.
- Persons, J.B., & Silberschatz, G. (1998). Are results of randomized clinical trials useful to psychotherapists? *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 66, 126-135.
- Sallows, G., & Graupner, T. (2005). Intensive behavioral treatment for children with autism. *American*

- Journal on Mental Retardation*, 110, 417-438.
- Schopler, E., Mesibov, G., & Baker, A. (1982). Evaluation of treatment for autistic children and their parents. *Journal of American Academy of Child Psychiatry*, 21, 262-267.
- Seligman, M.E.P. (1995). The effectiveness of psychotherapy. *American Psychologist*, 50, 965-974.
- Sheinkopf, S.J., & Siegel, B. (1998). Home-based behavioral treatment of young children with autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 28, 15-23.
- Sherer, M., & Schreibman, L. (2005). Individual behavioral profiles and predictors of treatment effectiveness for children with autism. *Journal of Clinical and Consulting Psychology*, 73, 525-538.
- Smith, T., Buch, G.A., & Gamby, T.E. (2000). Parent-directed, intensive early intervention for children with pervasive developmental disorder. *Research in Developmental Disabilities*, 21, 297-309.
- Smith, T., Groen, A.D., & Wynn, J.W. (2000). Randomized trial of intensive early intervention for children with pervasive developmental disorder. *American Journal on Mental Retardation*, 105, 269-285.
- Sparrow, S., Balla, D.A., & Cicchetti, D. (1984). Vineland Adaptive Behavior Scales. Circle Pines, MN: American Guidance Service.
- Stahmer, A.C., & Ingersoll, B. (2004). Inclusive programming for toddlers with autism spectrum disorders: Outcomes from the Children's Toddler School. *Journal of Positive Behavior Interventions*, 6, 67-82.
- Sundberg, M.L., & Partington, J.W. (1999). The need for both discrete trial and natural environment language training for children with autism. In P.M. Ghezzi, W.L. Williams & J.E. Carr (Eds.), *Autism: Behavior analytic perspectives* (pp. 139-156). Reno, NV: Context Press.
- Surgeon General. (1999). *Mental health: A report of the surgeon general*. Washington, DC: Department of Health and Human Services.
- Tassé, M.J., Aman, M.G., Hammer, D., & Rojhan, J. (1996). The Nisonger Child Behavior Rating Form: Age and gender effects and norms. *Research in Developmental Disabilities*, 7, 59-75.
- Thorndike, R.L., Hagan, E.P., & Sattler, J.M. (1986). *The Stanford-Binet Intelligence Scale* (4th ed.). Chicago: Riverside.
- Weiss, M. (1999). Differential rates of skill acquisition and outcomes of early intensive behavioral intervention for autism. *Behavioral Interventions*, 14, 3-22.
- Whitehurst, G.J. (2003). *Identifying and implementing educational practices supported by rigorous evidence: A user friendly guide*. Washington, DC: U.S. Department of Education, Institute of Education Sciences, National Center for Education Evaluation.
- Zigmond, A.S., & Snaith, P.R. (1983). The Hospital Anxiety and Depression Scale. *Acta Psychiatrica Scandinavica*, 63, 361-370.

Censito e tradotto da Alex dello staff di www.ippocrates.it

WWW.IPPOCRATES.IT

